

· 临床研究 ·

婴幼儿轻度胃肠炎伴良性惊厥并发可逆性胼胝体压部病变综合征临床特征

徐琳¹, 海涵², 夏欣², 郑权², 薛亦男¹

1. 湖南省第二人民医院儿科, 湖南长沙 410000; 2. 邵阳市中心医院, 湖南邵阳 422000

摘要: 目的 探讨婴幼儿轻度胃肠炎伴良性惊厥(CwG)并发可逆性胼胝体压部病变综合征(RESLES)的临床特征。方法 收集2010年1月至2019年1月收治住院的婴幼儿CwG,依据头颅MRI符合RESLES的患儿77例,其中单纯CwG组69例,CwG并发RESLES组(胼胝体病变组)8例。比较分析患儿一般情况、家族史、临床表现及预后情况。结果 胼胝体病变组单次惊厥时间>5 min发生率明显高于单纯CwG组(62.5% vs 17.4%, $\chi^2=6.060$, $P=0.014$)。出院6个月随访时,单纯CwG组失访4例,胼胝体病变组惊厥再发率为12.5%(1/8),与单纯CwG组的13.8%(9/65)比较差异无统计学意义($P>0.05$)。结论 婴幼儿CwG并发的胼胝体压部病变多表现为孤立性病变,临床表现与单纯CwG相似,但单次惊厥时间>5 min者较多,近期预后良好,远期神经功能影响需进一步研究。

关键词: 轻度胃肠炎伴良性惊厥; 胼胝体压部; 头颅磁共振; 临床表现; 预后

中图分类号: R 725 **文献标识码:** B **文章编号:** 1674-8182(2020)11-1523-04

Clinical characteristics of reversible splenial lesion syndrome in infants with mild gastroenteritis and benign convulsions

XU Lin*, HAI Han, XIA Xin, ZHENG Quan, XUE Yi-nan

* Department of Pediatrics, the Second People's Hospital of Hunan Province, Changsha, Hunan 410000, China

Corresponding author: XUE Yi-nan, E-mail: xyn16377@163.com

Abstract: Objective To investigate the clinical characteristics of reversible splenial lesion syndrome (RESLES) in infants with mild gastroenteritis complicated with benign convulsion (CwG). **Methods** The infants with CwG admitted to hospital from January 2010 to January 2019 were selected and divided into alone CwG group and CwG complicated with RESLES group (RESLES group) according to head-MRI criteria for RESLES. The general condition, family history, clinical manifestations and prognosis were analyzed retrospectively and compared between two groups. **Results** Out of 77 infants with CwG, 69 cases were in alone CwG group, and 8 cases were in RESLES group. The incidence of single seizure duration for more than 5 min in RESLES group was significantly higher than that in CwG group (62.5% vs 17.4%, $\chi^2=6.060$, $P=0.014$). At the 6-month follow-up, 4 cases were lost in CwG group, and there was no significant difference in recurrence rate of seizures between two groups (12.5% vs 13.8%, $P>0.05$). **Conclusion** CwG infants with RESLES have the similar clinical manifestations of infants with CwG alone, single seizure duration is more than 5 min. The further study needs to be performed for the long-term neurological effects, even though there is a good short-term prognosis for them

Key words: Mild gastroenteritis with benign convulsion; Splenium of corpus callosum; Magnetic resonance imaging of head; Clinical manifestations; Prognosis

婴幼儿轻度胃肠炎伴良性惊厥(benign convulsions with mild gastroenteritis, CwG)自1982年较先由日本Morooka提出后,很快被世界各地儿科学界认识并关注。儿童胃肠炎引起腹泻病一直是困扰儿童健康的重要疾病之一,婴幼儿腹泻伴重度脱水可引起神

经系统症状^[1]。婴幼儿CwG是一种通常发生在胃肠炎早期并发以非高热性惊厥为神经系统症状的疾病,其发病并不少见^[2],临床上通常需借助影像学将其与颅内病变进行鉴别,当影像学检查发现存在颅内病理改变时,容易误诊为颅内感染等重症颅内病变。可

逆性胼胝体压部病变综合征(reversible splenial lesion syndrome, RESLES)是一种由各种不同病因引起的累及胼胝体压部,以可逆性的胼胝体压部(SCC)病变为主要特点的临床-影像综合征^[3],临床表现主要为发热、惊厥、急性胃肠炎等,多发生在急性感染或惊厥相关疾病过程中;其颅脑 MRI 典型特征为 SCC 的卵圆形、非强化病灶,可伴或不伴有半卵圆中心及脑室周围白质受累。RESLES 的发病过程尚不明确,SCC 的细胞毒性水肿(特别是兴奋性神经毒性细胞水肿)可能是本病重要的病理生理学机制。婴幼儿 CwG 并发 SCC 改变报道少见,其是否存在与单纯 CwG 不同特异性临床表现并不清楚,本研究回顾性分析 CwG 并发 RESLES 临床特征,并总结其预后。

1 对象与方法

1.1 研究对象与分组 回顾性收集 2010 年 1 月至 2019 年 10 月邵阳市中心医院收治住院的婴幼儿 CwG 患儿。据头颅 MRI 是否符合 RESLES,分为单纯 CwG 组(单纯病例组)和 CwG 并发 RESLES 组(胼胝体病变组)。本研究经医院伦理委员会批准。

1.2 单纯病例组纳入标准^[4-6] (1)病程中有轻度胃肠炎表现,无脱水或轻度脱水,无电解质及酸碱平衡紊乱;(2)病程中有惊厥发生,惊厥发作时伴无热或低热(体温 $< 38.0\text{ }^{\circ}\text{C}$),可发生在胃肠炎病程中任一时间(包括胃肠炎前发生的惊厥);(3)发作间期脑电图无痫样放电;(4)头颅影像学检查无颅内病变。排除标准:(1)存在脑炎、脑膜炎、脑病的证据或存在颅脑外伤且可能与此次惊厥有关;(2)既往有惊厥史;(3)既往头颅影像学检查发现颅内异常者及存在先天性神经功能发育缺陷者。

1.3 胼胝体病变组纳入标准 符合单纯病例组纳入标准(1)(2)(3);头颅 MRI 检查符合 RESLES 表现。排除标准:符合单纯病例组排除标准(1)(2);既往头颅影像学检查发现胼胝体异常者及存在先天性胼胝体发育缺陷者。

1.4 研究内容 收集单纯病例组和胼胝体病变组患儿一般资料、家族惊厥史、临床资料及出院 6 个月时电话随访资料。

1.5 婴幼儿 CwG 惊厥处理 病程中初次惊厥且持续时间 $\leq 5\text{ min}$ 仅给予镇静、吸氧、预防窒息等处理。如惊厥发作 2 次及 2 次以上或出现一次惊厥时间 $> 5\text{ min}$ 者则给予单次丙戊酸钠治疗(5 mg/kg)。所有病例初次惊厥发作后 72 h 内完成头颅 MRI 检查,并

于临床治愈 1 个月内复查头颅 MRI。

1.6 出院后随访 由主管医生与患儿出院后 6 个月内进行电话或微信随访。随访内容:(1)患儿饮食及体格发育情况(体重);(2)患儿出院后是否再次出现惊厥发作及惊厥发作次数。

1.7 统计学方法 应用 SPSS 19.0 软件对数据进行统计分析。计量资料符合正态分布以 $\bar{x} \pm s$ 表示,两组间比较运用独立样本 t 检验;不符合正态分布以中位数(第 1 四分位数,第 3 四分位数)[$M(Q_L, Q_U)$]表示,组间比较运用秩和检验;计数资料以率(%)表示,组间比较运用校正 χ^2 检验或精确概率法。 $P < 0.05$ 为差异有统计学意义。

2 结果

2.1 一般资料 共收集婴幼儿 CwG 病例 77 例,其中单纯病例组 69 例,胼胝体病变组 8 例。其中男性 30 例,女性 47 例,年龄(1.9 ± 0.6)岁,体重(12.0 ± 1.2)kg,母亲年龄(28.3 ± 1.8)岁,有惊厥家族史者 16 例。两组婴幼儿年龄、性别、体重、母亲年龄及惊厥家族史比较差异无统计学意义($P > 0.05$)。见表 1。

2.2 临床特征 所有病例集中发生于秋冬季(当年 9 月至次年 2 月),以惊厥为首发症状者 5 例,惊厥发作呈现全身强直-阵挛发作者 75 例,病程中惊厥发作次数 ≥ 2 次者 32 例,单次惊厥时间 $> 5\text{ min}$ 者 17 例,中位住院时间 10.2(8.8, 11.3)d。两组以惊厥发作为首发症状、惊厥发作次数 ≥ 2 次、大便轮状病毒阳性的发生率及中位住院时间比较差异无统计学意义($P > 0.05$);胼胝体病变组单次惊厥时间 $> 5\text{ min}$ 发生率高于单纯病例组($P = 0.014$)。见表 2。胼胝体病变组病例典型头颅 MRI 表现为胼胝体病变在入院后 72 h 内呈现孤立性胼胝体压部改变,稍长 T_1 信号及稍长 T_2 信号,液体衰减反转恢复序列(Flair)呈稍高信号,弥散加权成像序列(DWI)呈高信号,表观弥散系数图(ADC)呈低信号。见图 1。

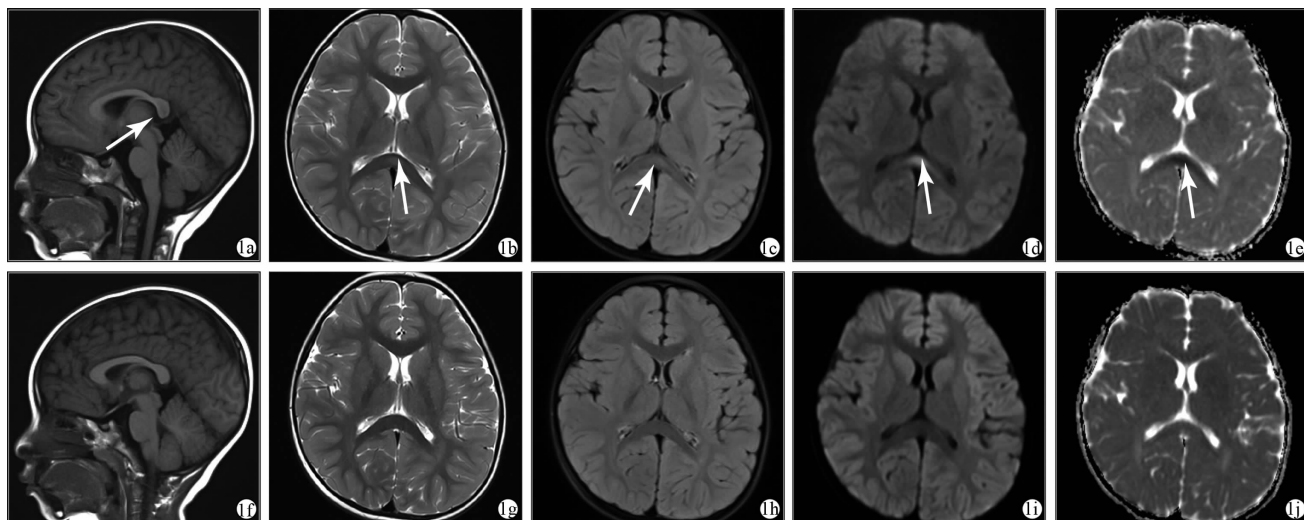
2.3 随访情况 临床治愈后 1 个月内随访头颅 MRI 62 例(80.5%),胼胝体病变组全部病例头颅 MRI 异常信号消失(图 1)。出院 6 个月接受电话随访 73 例(94.8%),惊厥再发者 10 例(13.7%)。胼胝体病变组病例均接受电话随访,惊厥再发者 1 例(12.5%);单纯病例组 4 例失访,惊厥再发者 9 例(13.8%),两组惊厥再发生率比较差异无统计学意义($P > 0.05$)。

表 1 两组患儿的一般资料比较

组别	例数	女/男(例)	年龄(岁, $\bar{x} \pm s$)	体重(kg, $\bar{x} \pm s$)	母亲年龄(岁, $\bar{x} \pm s$)	惊厥家族史(例)
胼胝体病变组	8	6/2	2.0 \pm 0.3	12.3 \pm 1.6	27.3 \pm 1.5	2
单纯病例组	69	41/28	1.9 \pm 0.8	11.9 \pm 1.1	28.5 \pm 2.0	14
χ^2/t 值		0.223	0.936	1.431	1.119	0.022
P 值		0.637	0.376	0.144	0.311	0.881

表 2 两组患儿的临床特征比较 [例(%)]

组别	例数	惊厥为首发症状	惊厥发作次数 ≥ 2 次	单次惊厥时间 > 5 min	住院天数[d, $M(Q_L, Q_U)$]	大便轮状病毒阳性
胼胝体病变组	8	1(12.5)	5(62.5)	5(62.5)	10.9(8.1, 11.4)	0
单纯病例组	69	4(5.8)	27(39.1)	12(17.4)	10.2(8.6, 11.5)	2(2.9)
χ^2/z 值		-	0.793	6.060	0.762	-
P 值		0.431	0.373	0.014	0.405	1.000



注:1a、1b、1c、1d、1e 分别为患儿病程中头颅 MRI 对应的 T₁、T₂、Flair、DWI、ADC 序列;1f、1g、1h、1i、1j 分别为临床治愈 1 个月内随访头颅 MRI 对应的 T₁、T₂、Flair、DWI、ADC 序列。

图 1 CwG 并发 RAMERS 患儿头颅 MRI 特征及转归

3 讨论

RESLES 是 Tada 等^[7]在 2004 年首次报道的一种临床影像综合征,以头颅影像胼胝体压部孤立性高信号病变为特征性表现,但是随后有不少学者发现它除了累及胼胝体压部,还可出现中央区脑白质的受累。本研究比较 CwG 并发 RESLES 与单纯 CwG 病例发现:并发 RESLES 患儿单次惊厥时间 > 5 min 发生率更高,头颅 MRI 显示病变仅在胼胝体压部,且为可逆性。RESLES 发病机制目前尚不清楚,部分学者认为 SCC 细胞毒性水肿是本病的重要病理生理学机制^[8],不过有研究者就影像学 DWI 信号的快速可逆性特点对此提出质疑,认为是由于少突和星形胶质细胞发生髓鞘内水肿的可能性更大。

相较欧洲和美国,CwG 在亚洲,特别是东亚国家更常见,主要散发在日本、韩国和香港^[9]。CwG 的发病机制并不清楚,病毒感染被认为是其可能机制之一,CwG 发病主要时间与婴幼儿腹泻病平行,提示该病发病与肠道病毒感染有关。然而作为肠道病毒感

染常见的病毒之一,轮状病毒可能致病机制在于可以通过直接的中枢神经系统病毒侵袭或释放病毒肠毒素 nsp4 诱导钙稳态破坏导致 CwG 的发生^[10-11]。既往研究及本研究结论均提示,轮状病毒感染所致的 CwG 发病率并不高,而且与并发 RESLES 并不相关,提示其他病毒,如诺如病毒、腺病毒等亦可导致 CwG 的发生^[9]。既往研究表明 CwG 惊厥发作多表现为丛簇性发作,且都表现为全面性发作形式,提示 CwG 惊厥发作可能是全脑性的功能紊乱所致。尽管惊厥发作形式及一次病程中发作次数 ≥ 2 次者,两组差异均无统计学意义,但单次惊厥时间 > 5 min 的发生率胼胝体病变组高于单纯病例组,提示胼胝体病变可能是脑损伤的高危因素,需引起临床医生注意,更进一步研究并随访其远期危害。

头颅 MRI 作为颅内病变重要的检查手段,在儿科已经得到广泛应用。RESLES 头颅 MRI 主要表现为胼胝体压部中央区圆形、椭圆形或弧形的异常信号,T1WI 呈略低信号,T2WI 及 T2FLAIR 呈略高信号,DWI 呈高信号影,增强扫描无强化^[12]。根据头颅

MRI 表现是否累及胼胝体压部以外的白质,分为 1 型和 2 型 RESLES。1 型主要表现为 SCC 孤立性的边界清晰的 DWI 高信号灶,此类型多见,文献报道中多为 RESLES 1 型。2 型除了胼胝体压部病变以外,病变还累及胼胝体以外的白质,常累及脑室周围白质、半卵圆中心,病变多呈对称性分布,此型较为少见,若首次检查对此病认识不足,容易造成误诊。本研究提示 CwG 并发的 RESLES 头颅 MRI 以孤立性病变为主,临床康复后可发生逆转,提示其损伤可能为非结构性损伤。

部分学者认为,CwG 与热性惊厥一样,同为情景诱发性惊厥发作^[13],然而 CwG 与癫痫有本质的区别,癫痫为异常大脑神经元放电所致,而 CwG 并无电生理上异常的证据,故在抗惊厥治疗时需要减少不必要的抗癫痫治疗^[14]。尽管合并的胼胝体压部病变可出现胼胝体影像学改变,然而这种影像学改变是可逆病变。

CwG 合并胼胝体压部病变尽管有临床惊厥症状和头颅影像学改变,然而随着疾病康复,头颅影像学改变呈现可逆性,其发病机制及远期颅脑损伤尚需进一步研究。

参考文献

[1] 何俊君,何海燕,张明真.轻度胃肠炎伴婴幼儿良性惊厥的临床分析[J].中国医药科学,2020,10(2):87-89.
[2] 卢嘉铭,刘光明,聂述山,等.975 例儿科急诊惊厥病因分析[J].中国小儿急救医学,2016,23(3):178-181,185.
[3] 张静,李涛,尹光恒,等.儿童可逆性胼胝体压部病变综合征的 MRI 表现[J].中华放射学杂志,2015,49(12):927-930.

[4] Wang YF,Zhou ZS. Clinical features of benign convulsions with mild gastroenteritis in Chinese infants[J]. World J Pediatr,2013,9(1):73-75.
[5] 王佩佩,赵玲玲.轻度胃肠炎伴良性惊厥的研究现状[J].中国全科医学,2016,19(18):2219-2222.
[6] Li TS,Hong SQ,Peng X,et al. Benign infantile convulsions associated with mild gastroenteritis: an electroclinical study of 34 patients [J]. Seizure,2014,23(1):16-19.
[7] Tada H,Takanashi J,Barkovich AJ,et al. Clinically mild encephalitis/encephalopathy with a reversible splenic lesion[J]. Neurology,2004,63(10):1854-1858.
[8] 方玮,章殷希,丁美萍.可逆性胼胝体压部病变综合征[J].中华神经科杂志,2016,49(3):258-260.
[9] Castellazzi L,Principi N,Agostoni C,et al. Benign convulsions in children with mild gastroenteritis[J]. Eur J Paediatr Neurol,2016,20(5):690-695.
[10] Liu B,Fujita Y,Arakawa C,et al. Detection of Rotavirus RNA and antigens in serum and cerebrospinal fluid samples from diarrheic children with seizures [J]. Jpn J Infect Dis,2009,62(4):279-283.
[11] Yeom JS,Kim YS,Park JS,et al. Role of Ca²⁺ Homeostasis disruption in Rotavirus-associated seizures [J]. J Child Neurol,2014,29(3):331-335.
[12] Kashiwagi M,Tanabe T,Shimakawa S,et al. Clinico-radiological spectrum of reversible splenic lesions in children[J]. Brain Dev,2014,36(4):330-336.
[13] Verrotti A,Moavero R,Vigevano F,et al. Long-term follow-up in children with benign convulsions associated with gastroenteritis[J]. Eur J Paediatr Neurol,2014,18(5):572-577.
[14] 杨洁辉.轻度胃肠炎伴良性惊厥临床特点及复发危险因素分析[D].太原:山西医科大学,2019.

收稿日期:2020-04-01 修回日期:2020-04-30 编辑:石嘉莹

(上接第 1522 页)

[9] 胡凤娟.瑞芬太尼复合丙泊酚靶控输注用于无痛纤维支气管镜检查术的效果[J].河南外科学杂志,2019,25(3):80-82.
[10] 刘长庭.纤维支气管镜诊断治疗学(精装)[M].北京:北京大学医学出版社,2003.
[11] 袁媛,裴迎华.张杰无痛纤支镜的研究进展[J].国际呼吸杂志,2017,37(2):157-160.
[12] 杨灿,王尔华,顾小萍,等.可唤醒无痛麻醉技术在消化内镜诊疗中的应用[J].中华消化内镜杂志,2014,31(9):528-530.
[13] 刘兴建,任和.依托咪酯联合丙泊酚用于老年患者无痛胃肠镜

检查的麻醉效果及对患者认知功能的影响[J].中国药房,2017,28(15):2028-2032.

[14] 陈晓芳,张国艳,徐志新.依托咪酯乳剂联合丙泊酚对全麻诱导时血流动力学及红细胞免疫黏附功能功能的影响[J].医学临床研究,2019,36(2):346-347,348.
[15] 李志伟,陆光兵.依托咪酯脂肪乳联合芬太尼、尼卡地平在无痛纤支镜检查中的应用[J].四川医学,2010,31(10):1488-1489.

收稿日期:2020-03-13 修回日期:2020-04-02 编辑:王宇